副耳下腺から発生したと思われる良性多形性腺腫の1症例

島岡成和・連 利隆・白 数 力 也・井上毅 一郎・高 須 淳

Benign pleomorphic adenoma originated probably from the accessory parotid gland: Report of a case

Shigekazu SHIMAOKA・Toshitaka MURAJI・Rikiya SHIRASU・Kiichiro INOUE・Jun TAKASU

緒 言

耳下腺本体より離れて存在する副耳下腺については、その形態学的研究の報告はあるが、臨床症状を伴い、治療の対象となった報告は少ない。また、そこから発生した良性腫瘍についての報告は少なく、Jack ら¹⁾(1977)および Perzik ら²⁾(1966)の報告があるにすぎない。

われわれは、34歳の女性の左側耳下腺部に発生した良性多形性腺腫の1症例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 34歳 女性。

初 診：昭和50年11月

主 訴：左側耳下腺部の腫脹。

既往歴：昭和46年、虫垂炎手術。その他特記すべき事項はない。

家族歴：特記すべき事項はない。

現病歴：約10年前、左側耳下腺部にアズキ大の硬結を自覚したが、疼痛もなくそのまま放置していた。約3年前より無痛性に増大傾向を示し、審美障害を伴ってきたので来院した(写真1, 2)。

局所所見：左側耳下腺部に小鶏卵大、弾性硬の腫瘤を認めた。腫瘤は触診により皮下に存在すると考えられ、可動性で表面は一部凹凸を呈する以外はほぼ平滑で、同部の皮膚は正常であった。また、患側の耳下腺開口部に変化はなく、唾液の排泄状態にも左右差はみられず、顔面神経の機能障害も認めなかった。

X線の所見：油性の38%リピヨドール約1.2mlを用いた耳下腺造影像では、A-P像において浅葉の一部に腫瘍の圧迫によると思われる造影剤の陰影欠損がみられた(写真3)。角度をかえたA-P像(写真4)および側方向

で認められる耳下腺前方部の下方への分枝には消失が認められ(写真5)、その部位は腫瘍と一致しているとともに、外方よりの圧迫で腺体の一部が変形しているような所見がみられた。他の導管では終末部まで造影剤が充満

写真1 初診時顔貌所見

写真2 初診時左側面所見

大阪歯科大学口腔外科学教室第1講座(主任：高須淳教授)

First Department of Oral Surgery, Osaka Dental University (Chief: Prof. Jun Takasu)

受付日：昭和53年5月25日

写真 3 造影X線像・A-P像

写真 4 造影X線像：角度をかえたA-P像

し、腺葉の輪郭が明瞭に認められ、形態的には正常と思われる。耳下腺前方部の下方に腫瘍の存在が疑われた。

全身状態：体格、栄養ともに良好で全身的に異常はない。

臨床検査所見：特に異常はみられなかった。

臨床診断：左側耳下腺部良性腫瘍。

手術所見および経過：耳下腺本体へ手術侵襲が拡大す

写真 5 造影X線像：側方向

写真 6 腫瘍摘出中

写真 7 摘出腫瘍

る可能性があること、患者が神経質であったことから、全身麻酔下に腫瘍の摘出を行った。耳下腺開口部よりエパンス・ブルーを約1.5ml注入後、皮切は通法によりS字状とした。腫瘍は皮下で咬筋上に存在し、周囲組織との癒着はなかった。特に耳下腺本体との関係は認めず、腫瘍のみを容易に摘出できた。なおエパンス・ブルーは耳下腺本体を青染していたが、腫瘍は染まっていなかつ

写真 8 摘出腫瘍の断面

写真 9 病理組織像 (弱拡大, H-E 染色)

写真 10 病理組織像 (弱拡大, H-E 染色)

た(写真 6)。術後の経過は良好で左側耳下腺よりの唾液分泌にも異常を認めず、顔面神経麻痺、瘻孔形成などの合併症もなく、術後8日目に退院した。

摘出物の肉眼的所見：摘出した腫瘍の大きさは小鶏卵大、表面は灰白色で一部を除きほぼ平滑で1層の線維性被膜でおおわれ、弾性硬で一部骨様硬を思わせる部分もあった(写真 7)。腫瘍分割時の感触は脱灰骨を切っている感じで断面は灰白色、中央部はわずかに帯黄色であ

った(写真 8)。

組織学的所見：表層は線維性被膜でおおわれ、実質部は多角形細胞の充実性増殖がみられ、一部は腺管構造を呈していた。間質は粘液様変化が著明で線維性の所見や硝子化の所見がみられ、一部は軟骨状を呈しているが、細胞に異型性はみられず、典型的な良性多形性腺腫の病理組織像を呈していた(写真 9, 10)。

確定診断：良性多形性腺腫。

考 察

副耳下腺および迷入唾液腺に関して、石川ら³⁾(1969)は両者とも唾液腺組織の小塊が耳下腺本体の近く、あるいは全くかけ離れた部位に存在する異所性唾液腺に属し、そのうちで独立して分泌機能を営み、排泄管を有するものを副耳下腺といい、そうでないものは迷入唾液腺とすると述べている。

副耳下腺の発生頻度について青ら⁴⁾(1956)は剖見により44体88例中31例で35.2%とし、Jackら¹⁾(1977)は96例中20例で21%あったとし、上条⁵⁾(1969)は30.6%と述べているが、北村⁶⁾が生体の耳下腺造影により観察した発生頻度は48%であるとしているが、これは耳下腺本体の前突起が算入されているのではないかと考えられており、いずれにせよかなり頻度の高いものと考えられる。

副耳下腺の位置についてJackら¹⁾(1977)、青ら⁴⁾(1956)はすべて耳下腺管の上方で管に接していると述べており、石島⁷⁾(1958)は右18例、左14例中おのおの1例のみ管の下方に存在したと述べている。また、Perzikら²⁾(1966)は耳下腺管上方に多いが、下方にも存在すると述べている。本症例においては耳下腺管の下方に存在しているまれな例と考えられる。

咬筋との関係について青ら⁴⁾(1956)は、その大半は咬筋前縁より後方にあり(左側：76.9%、右側：72.2%)、咬筋前縁と副耳下腺前縁との距離は5.1~15.0mm(左側：53.9%、右側：61.1%)が多いと述べている。

石島⁷⁾(1958)は副耳下腺の耳下腺本体に対する位置はほとんどが10mm以内であり、また、Jack¹⁾(1977)は平均6mmであると述べていることから、副耳下腺から発生する腫瘍と耳下腺本体から発生したものとの鑑別が困難であると考えられ、その場合、sialogramが大きな役割を果たすといわれるが、本症例でも術前の造影所見で耳下腺管前方部下方の分枝の存在およびそこを中心とした耳下腺本体の圧迫像から、副耳下腺の存在が考えられ、臨床所見、手術所見などから副耳下腺から発生した良性多形性腺腫と考えた。

石川ら³⁾(1969)によると異所性唾液腺は耳下腺部リンパ節に迷入した腺組織が多いとしているが、本症例の場合、病理組織学的にも典型的な良性多形性腺腫であり、

リンパ節内の腺組織とは考えられなかった。また、腫瘍が咬筋上に存在していたことや造影像において耳下腺管の下方への分枝が存在していたことから、小唾液腺原発の腫瘍とも考えられなかった。一般に耳下腺腫瘍摘出が困難とされる理由は、耳下腺内部を後方より前方に向けて顔面神経が走行し、腺内で複雑に分岐吻合を繰り返して、それを損傷することにより麻痺を引き起こし、生理的精神的に障害を与えることのためである。皮切は腫瘍を十分に露出させ、かつ術後に醜い瘢痕を残さぬため一般にS字型切開線が用いられている。また、最も重篤な手術合併症は顔面神経麻痺であるが、北村ら⁹⁾(1971)によると耳下腺深、浅いいずれかの葉全体または一部とともに病巣を摘出した場合、不全麻痺が20.5%、完全麻痺が19.3%を占め、その予後について不全麻痺はすべて2週間以内に回復し、完全麻痺は2週間から24か月の間に回復している。腫瘍の位置による障害は浅葉にある場合、最も低く、たとえ麻痺が発生しても部分麻痺が多く、深葉では全枝麻痺が多いと述べている。また、三村ら⁹⁾(1974)は40例中6例(15%)に麻痺がみられたと報告している。副耳下腺と顔面神経との関係について、青ら⁴⁾(1956)は副耳下腺を通過または接して通過する神経の本数は0本より4本までであり、そのうち1本が最も多く右側:55.6%、左側:53.8%であり、神経の経過状況は副耳下腺を通過するものより、上縁に接して経過するものが最も多いと述べていることから考え、副耳下腺から発生した腫瘍の摘出においては顔面神経に対する障害は少ないと考えられる。本症例では腫瘍は耳下腺本体とは関係をもたず腫瘍のみ摘出できたため、顔面神経に対する侵襲をさけることができた。

副耳下腺についてなんらかの臨床症状を伴い治療の対象となった報告は少なく、野井倉ら¹⁰⁾(1976)や楊井ら¹¹⁾(1976)の副耳下腺の化膿性炎症についての報告があるにすぎない。耳下腺部に発生する腫瘍については、その発生部位について浅葉、深葉との分類のみで、特に副耳下腺発生の腫瘍は本邦では文献を渉猟した限りではみられず、Jackら¹⁾(1977)およびPerzikら²⁾(1966)の報告の中で述べられているにすぎないが、副耳下腺の発現頻度およびその存在部位は耳下腺本体の近くに存在するものが多いことから考え、耳下腺浅葉由来の腫瘍として分類されているもののうちで、副耳下腺発生のもののがかなり含まれているのではないかと考えられる。

良性多形性腺腫の再発について Footeら¹²⁾(1953)は12~36%、太田ら¹³⁾(1955)は20~30%、島田¹⁴⁾(1955)は47例中4例で8.5%が再発したと述べている。最近の報告では児玉¹⁵⁾(1969)は27例中1例が再発したと述べ、三村ら⁹⁾(1974)は32例の耳下腺腫瘍中8例(25%)が再発し、再発傾向が強いと述べている。

一方、Fineら¹⁶⁾(1960)は治療後5年から30年の間で、馬場ら¹⁷⁾(1973)は最高10年までの予後観察で再発はな

かったと述べている。

本症例においては現在2年6か月を経過して再発傾向はみられないが、治療後14年および17年の長期経過後に再発がみられた症例もあるため¹⁸⁾、今後とも長期にわたる経過観察を続ける予定である。

結 論

左耳下腺部に発生した良性多形性腺腫を経験した。術前の造影所見で耳下腺管前部下方の分枝の存在およびそこを中心とした耳下腺本体の圧迫像を認め、それに加え臨床所見、手術所見などから副耳下腺から発生した良性多形性腺腫と考えた。

術後の経過は良好で顔面神経麻痺、瘻孔形成などの合併症も認めず、約2年6か月経過しているが再発傾向もなく、引き続き経過観察を行う予定である。

本論文の要旨は第22回日本口腔外科学会総会(昭和52年10月23日、東京)において発表した。

文 献

- 1) Jack, F.B., et al.: The human accessory parotid gland; Its incidence, nature, and significant. *Oral Surg* 43: 671 1977.
- 2) Perzik, S.L., et al.: Surgical management of preauricular tumors of the accessory parotid apparatus. *Am J Surg* 112: 498 1966.
- 3) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学(II). 永末書店, 京都, 1969, 873頁.
- 4) 青久雄, 岡田典雄: 副耳下腺の解剖学的研究. 東京歯科大学解剖学教室業績集 1: 1956.
- 5) 上条雅彦: 口腔解剖学 5. 第一版, フナトーム社, 東京, 1969, 1517頁.
- 6) 北村 武: 4) より引用.
- 7) 石島公徳: 日本人に於ける耳下腺の解剖学的研究. その一 形態. 東京歯科大学解剖学教室業績集 8: 1958.
- 8) 北村 武, 他: 耳下腺腫瘍の臨床——教室20年間の統計的観察. *耳鼻臨床* 64増: 1286 1971.
- 9) 三村 孝, 他: 耳下腺腫瘍の臨床診断. 病理組織学的所見と手術成績. *日本外科学会雑誌* 75: 281 1974.
- 10) 野井倉武憲, 他: 副耳下腺の1例. *歯科放射線学会雑誌* 16: 232 1976.
- 11) 楊井 孝, 他: 副耳下腺炎の2治療例について. *日口外誌* 22: 996 1976.
- 12) Foote, F.W., Frazell, E.L.: Tumors of the major salivary glands. *Cancer* 6: 1065 1953.
- 13) 太田邦夫: 唾液腺腫瘍について(形態学的問題を中心に). *臨床病理* 3: 203 1955.
- 14) 島田義弘: 所謂唾液腺型混合腫瘍の組織発生に就いて(唾液腺腫瘍の諸型の比較研究). *日病*

- 会誌 44: 243 1955.
- 15) 児玉 学: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 日大歯学 43: 307 1969.
- 16) Fine G., et al.: Tumors of the minor salivary glands. Cancer 13: 653 1960.
- 17) 馬場謙介, 他: 唾液腺腫瘍(その組織型と予後). 癌の臨床 19: 893 1973.
- 18) Frable, W.J., and Elzay, R.P.: Tumors of minor salivary glands: A report of 73 cases. Cancer 25: 932 1970.
-